

원장 미부낭종 1예

— 증례 보고 —

울산대학교 의과대학 서울중앙병원 외과학교실, ¹병리학교실, ²방사선과학교실

안병울 · 정춘식 · 이동희 · 유창식
이호정¹ · 이문규² · 김진천

= Abstract =

Tailgut Cyst

— A case report —

Byeong Yul Ahn, M.D., Choon Sik Jeong, M.D., Dong Hee Lee, M.D.
Chang Sik Yu, M.D., Ho Jung Lee, M.D.¹, Moon Kyu Lee, M.D.²
and Jin Cheon Kim, M.D.

*Department of Surgery, ¹Pathology and ²Radiology,
College of Medicine, University of Ulsan, Asan Medical Center, Seoul, Korea*

Tailgut cyst is a rare congenital lesion in retrorectal space. The clinical significance of tailgut cyst presents its morbidity that occurs in the unrecognized and incompletely treated lesion. A forty four year-old female patient visited with lower abdominal pain during defecation. Preoperative abdominopelvic MRI and endorectal ultrasonography revealed a retrorectal mass suggestive of leiomyoma, dermoid cyst, teratoma, or duplication cyst of rectum. She underwent complete resection of retrorectal mass by trans-sphincteric approach. The mass was multilocular cyst lined by multiple types of epithelium. It was histologically confirmed as a tailgut cyst. She recovered uneventfully. This report includes the case and a brief review of tailgut cyst.

Key Words: Tailgut cyst, Congenital cyst, Retrorectal cyst

서 론

성인에서 후직장강내 생기는 종양은 흔하지 않

책임저자 : 안병울, 서울시 송파구 풍납동 388-1번지
서울중앙병원 일반외과(우편번호: 138-736)
(Tel: 224-3480, Fax: 474-9027)

으며 특히 선천성 낭종은 매우 드물다.³ 원장 미부낭종은 후직장강내에 발생하는 매우 희귀한 선천성 낭종으로 수년에 1~2증례 보고되며 우리나라에서는 2예가 외국논문에서 보고되었다.^{3,7} 본 낭종은 조기 진단이 어렵고, 오진되기 쉬우므로 정확히 치료되지 않은 경우가 빈번하다. 이 경우 재발과 만성질환으로 이행해서 드물게는 악성화한

다는 보고도 있다.⁹ 배변시 하복부 불편감을 주소로 내원한 44세 여자에서 발생한 원장 미부낭종을 치험하였기에 문헌 고찰과 함께 보고한다.

종 례

44세 여자 환자가 배변시 하복부 불편감을 주소로 내원하였다. 3년전 자궁근종으로 전자궁절제술을 받은 후 배변시 하복부 불편감이 있었으며

내원 2개월전 개인 산부인과에서 이학적 검사상 직장 외부에 종괴가 촉진되어 전원되었다. 기왕력상 3년전 자궁근종으로 자궁절제술을 받은 것 이외 특이사항은 없었다. 이학적 소견상 전강해 보이는 중년 여자로 직장수지검사상 항문상방 8 cm에서 후직장벽을 압박하는 종괴가 촉진되었다. 종괴는 수지검사상 대부분 촉진되었으며 연결이며 압통은 없었으나 약간의 고정성이 있었다. 대장내시경상 직장점막의 이상이나 장관내 종괴는 발견

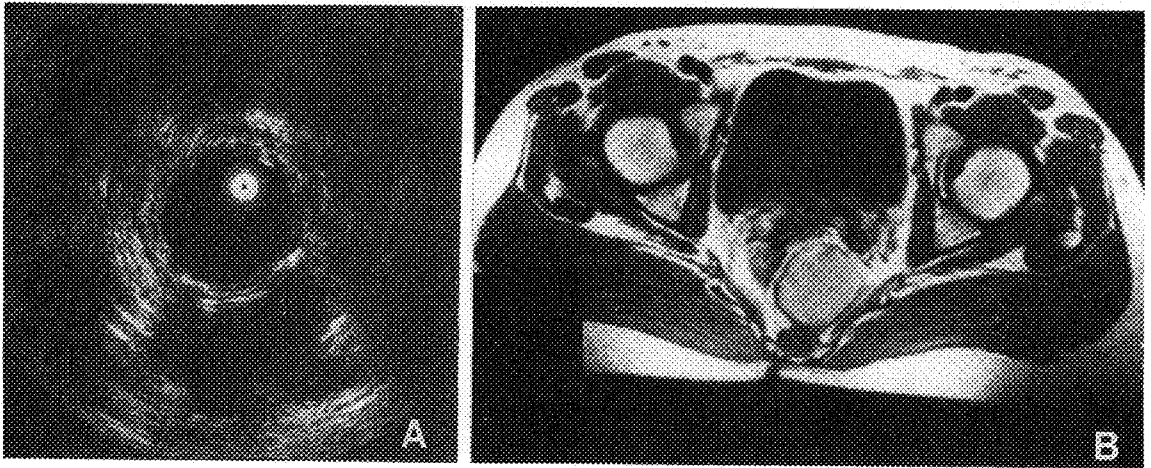


Fig. 1. A presacral retrorectal tailgut cyst in 44-year-old woman. A) Transrectal sonogram shows an anechoic tailgut cyst posterior to the rectum. B) Axial T1-weighted spin-echo image shows an intense well-defined lesion in presacral retrorectal space.

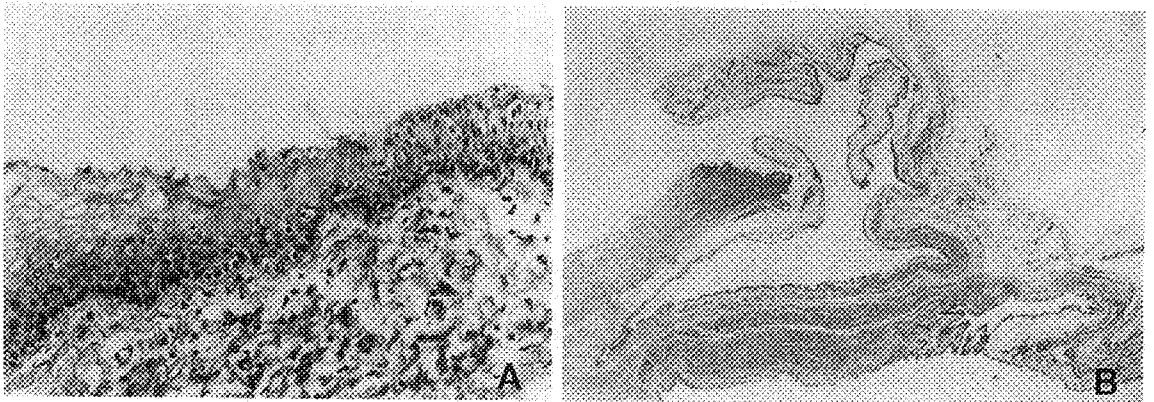


Fig. 2. Microphotograph of retrorectal cyst shows various mixture of lining cells, including squamous, columnar, and transitional epithelia. (H&E stain, $\times 400$)(A) with multilocular cystic spaces including bundles of smooth muscle at the periphery of cyst (H&E, $\times 40$)(B).

할 수 없었다. 경직장 초음파 단층촬영술상 저에코성 타원형의 종괴가 후직장강내 관찰되었고, 표면은 불규칙한 별모양이었으며 내부는 비교적 균일한 에코를 나타내었다(Fig. 1A). 복부 및 골반 MRI상 경계가 명확한 종괴가 후직장강내 관찰되었는데 그 성상은 초음파 소견과 일치하였다(Fig. 1B). 후직장강내 종양으로 평활근종, 유피낭종, 기형종, 직장 중복낭종의 의심하에 후방접근 방식의 경괄약근 절개에 의한 종괴 절제술을 시행하였다.

수술 소견상 항문상방 6 cm에서 6×4 cm의 후직장강내 타원형의 낭종이 관찰되었으며 그 경계는 명확하였으나 항문거근과 심한 염증성 유착이 있었고, 그 내용물은 피지성으로 유피낭종과 유사하였다.

조직검사상 낭종은 다방성이었으며 상피세포가 편평상피, 원주상피, 이행상피 등으로 다양하게 구성되어 있었고(Fig. 2A), 낭종주위에 평활근육이 관찰되었지만 뚜렷한 근육층은 아니며 장막은 관찰되지 않는 전형적인 원장 미부낭종으로 확인되었다(Fig. 2B).

수술후 13일째 합병증 없이 퇴원하였고, 퇴원 2개월 현재 건강하게 지내고 있다.

고 찰

원장 미부낭종은 후직장강내 생기는 극히 드문 낭종의 하나로 초기 발생시기에 배아가 가지고 있던 진성 미부가 발생 35일째 최고로 발달한 이후 점차 퇴화되어 발생 56일째 거의 소멸되는데, 이것이 퇴화되지 않고 항문 생성부위의 하부에 남아있게 되어 생긴다고 한다.^{2,3,9} 이 낭종은 Middeldorpf가 1885년 처음 보고한 이후 수년에 한번씩 보고되는 정도로 드물며 그 명칭도 후직장 낭종과오종, 원장 미부잔유부, 후항문장낭종 등으로 다양하게 불렸으나 지금은 발생에 근거하여 원장 미부낭종으로 소개되고 있다.³

진단기준도 많은 변화를 거쳐 확립되었는데 후직장강 혹은 전천골강내 존재하는 낭종으로 장형상피세포(편평, 원주, 이행 등을 한가지 혹은 그

이상)를 가지고 있으며 장근신경총이 있는 명확한 근육층이나 장막이 없어야 한다.^{1,3,11} 이때 후직장강 혹은 전천골강은 전방의 직장, 후방의 천골, 상방의 복막반전, 하방의 항문거근으로 둘러싸인 공간으로 정의된다.²

원장 미부낭종은 여자에게 많고 신생아에서 노년층까지 거의 모든 연령에서 보고되고 있으나 주로 중년층에서 많으며, 백인에서 주로 보고되었는데 한국인의 경우는 2예 보고되었다.^{3,7,11} 증상은 후직장강내 종양종 악성종양인 경우 특징적인 임상증상을 나타내는 반면 양성종양인 원장 미부낭종은 특징적인 임상증상을 나타내지 않기 때문에 발견이 늦어지거나 건강검진이나 우연한 이학적 검사상 발견되는 경우가 많다.¹³ 증상이 있는 경우 낭종의 병발성 염증 및 종양 압박에 의해서 후복부나 후배부 통증, 배변시 통증, 직장 포만감, 변주협소, 요로폐쇄, 발열 등이 나타난다.^{3,12} 방사선학적 진단은 CT 혹은 MRI 촬영이 진단과 추적 관찰에 도움을 주고있으며,^{6,8,10} 최근 경직장 초음파 단층촬영이 진단에 많은 도움을 주는 것으로 알려졌다.⁴ 그러나 이러한 영상검사라도 술전 진단되는 경우는 거의 없고 술후 조직검사에 의해서 진단된다.³

원장 미부낭종은 대개 오진이나 진단의 지연, 부적절한 치료로 염증이 발생하여 후직장강내 농양이나 반복되는 항문주위 치루 등이 문제가 되고있으며,¹⁵ 극히 드문 경우이지만 악성으로 이행된 경우도 있다.⁹ 따라서 정확한 진단과 함께 진단의 지연을 방지하기 위하여 특별한 원인없이 비특이적인 동통이나 요통이 있는 경우 반드시 직장수지 검사를 비롯한 면밀한 이학적 검사가 필수적이다.¹³ 치료는 완전절제가 가장 중요하며 절개에 의한 생검이나 단순 절개는 재발이나 염증의 위험성이 크며 경항문 낭종절제 또한 시야가 좋지 않으며 감염의 위험이 크다. 그러므로 종괴의 위치에 따라 절제하기 알맞은 접근방법이 시도되어야 하는데 직장수지검사상 낭종이 어렵게 촉지되는 상부 후직장강내 낭종은 전방접근이 좋으며 촉지가 쉬운 하부 후직장강내 낭종은

후방접근이 완전절제에 가장 적절한 방법이라고 한다.^{3,5,13}

본 증례는 배변시 하복부 불쾌감의 비특이적 증상을 가지고 있던 44세 여자가 증상과는 관계 없이 우연히 산부인과에서 시행한 이학적 검사상 낭종이 촉진되어 내원한 예이다. 증상이 경미하고 일상생활에 불편감이 없었으므로 증상 발현 3년 후 낭종을 발견할 수 있었다. 술전 시행한 MRI 및 경직장 초음파단층촬영상 후직장전천골강내 생길 수 있는 종괴중 평활근종, 유피낭종, 기형종, 직장중복 낭종 등의 가능성하에 수술을 시행하였다. 수술은 종괴의 위치가 후직장전천골강내 위치하므로 후방 경괄약근절개방식으로 절제를 용이하게 시행할 수 있었다.

결 론

원장 미부낭종은 매우 드문 질환으로 정확한 진단이나 적절한 치료를 받지 못한 경우 빈번한 합병증이나 드물게 악성으로 이행될 수 있다. 중년여자에서 후복부나 후배부 동통이나 배변시 동통등 의심되는 병력이 있을 때 면밀한 이학적 검사와 영상진단을 통하여 종괴를 확인하며 그 위치에 따라 적절한 외과적 절제가 필요하겠다.

REFERENCES

1. Campbell WL, Wolf M. Retrorectal cysts of developmental origin. *Am J Roentgenol* 1973; 117: 313.
2. Caropreso PR, Wengert PA Jr., Milford HE. Tailgut cyst-A rare retrorectal tumor: report of a case and review. *Dis Colon Rectum* 1975; 18: 600.
3. Hjermstad BM, Helweig EB. Tailgut cyst. *Am J Clin Pathol* 1988; 89: 139-147.
4. Hutton KAR, Benson EA. Case report: tailgut cyst-assessment with transrectal ultrasound. *Clin Radiol* 1992; 45: 289.
5. Jain P, Hawkins S, King A: Tail-gut cyst. *Aust Radiol* 1997; 41: 209.
6. Johnson AR, Ros PR, Hjermstad BM. Tailgut cyst: diagnosis with CT and sonography. *Am J Roentgenol* 1986; 147: 1310.
7. Kim MJ, Kim WH, Kim NK, et al. Tailgut cyst: multilocular cystic appearance on MRI. *J Comput Assist Tomogr* 1997; 21: 731.
8. Liessi G, Cesari S, Pavanello M, et al. Tailgut cysts: CT and MR findings. *Abdom Imag* 1995; 20: 257.
9. Marco V, Autonell J, Farre S, et al. Retrorectal cyst-hamartomas. *Am J Surg Pathol* 1982; 6: 708.
10. Ottery FD, Carlson RA, Gould H, et al. Retrorectal cyst-hamartomas: CT diagnosis. *J Comput Assist Tomogr* 1986; 10: 263.
11. Pyo DJ. Tailgut cyst (retrorectal cyst hamartoma): case report and review. *Mt Sinai J Med* 1990; 57: 252.
12. Stephenson BM, Bartlet M, Nirula R, et al. Recent change in a tailgut cyst: presenting as urinary retention. *Br J Urol* 1990; 66: 326.
13. 조용필, 김진천, 김영태 등. 후직장전천골강내 종양. *대한대장항문학회지* 1995; 11: 169.